

再発性多発性心粘液腫の1 症例

Recurrent multiple cardiac myxomas: Report of a case

高橋 利之
羽田 勝征
坂本 二哉
竹中 克
天野 恵子
山口 経男
石光 敏行
高橋 久子

Toshiyuki TAKAHASHI
Yoshiyuki HADA
Tsuguya SAKAMOTO
Katsu TAKENAKA
Keiko AMANO
Tsuneo YAMAGUCHI
Toshiyuki ISHIMITSU
Hisako TAKAHASHI

Summary

A case of recurrent multiple cardiac myxomas was presented. The patient was a 27-year-old housewife. Four years ago, she underwent urgent resection of a left atrial myxoma and replacement of the interatrial septum with a patch graft by right atrial approach. The tumor was very friable and a part of the tumor dropped into cardiac chambers during the operation, and immediately saline lavage and aspiration were performed. The recovery was uneventful.

On March, 1981, she was readmitted to our hospital because of increasing dry cough. Two-dimensional echocardiography demonstrated abnormal masses in the right atrium, right ventricle, and left atrium. Open heart surgery revealed three independent tumors, which were successfully removed. All tumors were benign myxomas histologically. The patient returned to full-time houseworks again.

A case of recurrent multiple myxomas has not been previously reported. The recurrence of the myxoma in our case is thought to be caused by implantation of tumor cells during the initial operative procedure. Our case will suggest the malignant potentiality of cardiac myxoma. The necessity of radical excision and gentle handling of the tumor during the operation are reemphasized. Postoperative follow-up study is also mandatory for early detection of the recurrence of this potentially malignant neoplasm.

Key words

Cardiac myxoma Echocardiography

東京大学医学部 第二内科
東京都文京区本郷 7-3-1 (〒113)

The Second Department of Internal Medicine,
Faculty of Medicine, University of Tokyo, Hongo
7-3-1, Bunkyo-ku, Tokyo 113

Presented at the 23rd Meeting of the Japanese Society of Cardiovascular Sound held in Kurume, October 8-10, 1981
Received for publication March 1, 1982

はじめに

心粘液腫は病理組織学的には良性腫瘍であるが、手術例の増加に伴い、再発例、転移例が報告されつつある¹⁾。

我々は最近、左房粘液腫摘出術4年後に右房、右室、左房を含む複数の心腔内に粘液腫の再発をみた稀な1症例を経験したのでここに報告する。なお、この症例の初回の経過は著者らの1人、竹中ら²⁾によりすでに報告されているが、今回の再発を考える上で現病歴が重要な要素であるので、初回の入院経過も合わせて報告することとする。

症例報告

症例：27歳の主婦

主訴：咳嗽

家族歴、既往歴：特記すべきことなし

現病歴：1977年2月頃より咳嗽と呼吸困難が出現。近医受診し心エコー図検査にて左房粘液腫が疑われ、4月、当科に紹介入院となった。入院時胸部レ線写真にて心拡大(CTR 62%)、心電図

にて左房負荷、II, III, aVF, V₅₋₆の陰性T波を認めた(Fig. 1)。また心エコー図法にて僧帽弁(MV)の弁口に逸脱する腫瘍と心嚢液貯留(Effusion)が認められた(Fig. 2)。患者は心エコー図検査直後から意識障害が出現し、傾眠状態となり、また軽度の右半身不全麻痺を伴ったため、入院5日後、当院胸部外科にて救急手術が施行された。開胸時、心嚢は緊満し、心タンポナーデの状態であった。心嚢液300mlを吸引排除した後、左房に切開を加え、心房中隔卵円窩部に付着した有茎性の腫瘍を摘出した(Fig. 3)。腫瘍はゼリー状で非常に脆く、摘出時手術操作にて一部が心腔内にこぼれ落ちたため、直ちに生理的食塩水にて十分洗浄し、吸引した。その後、右房に切開を加え、心房中隔卵円窩部を径2cm大に切除し、同部にEPTFEパッチ(径2.5cm)を縫着した。左房内以外には腫瘍は見出されなかった。腫瘍は病理学的には良性粘液腫であった。

術後経過は順調で神経学的所見は消失し、その後患者は完全に家庭生活に復帰し、1979年11月には第2子を正常分娩した。

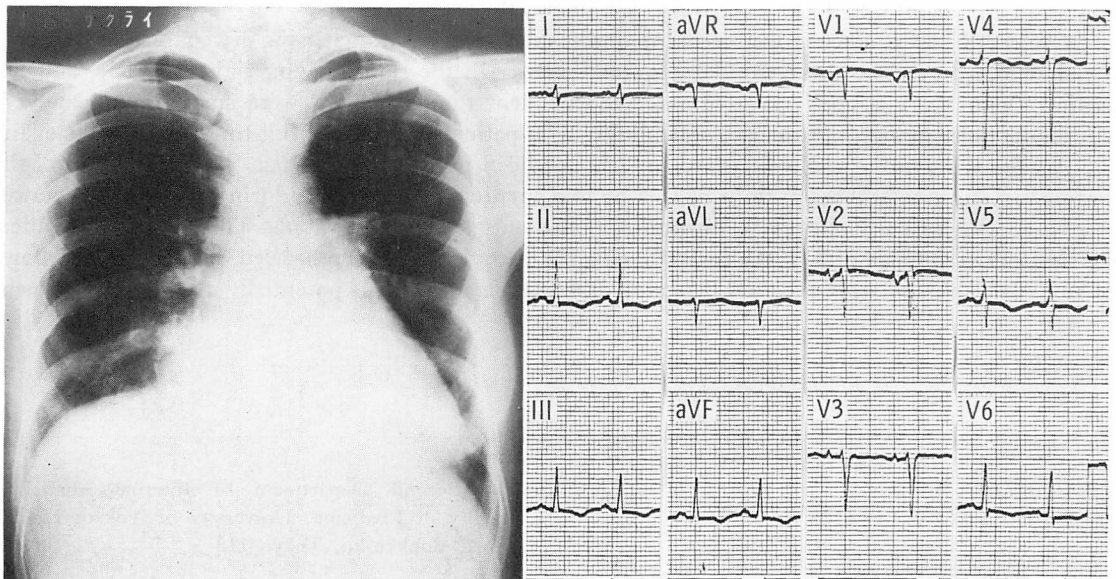


Fig. 1. Chest roentgenogram and electrocardiogram on the first admission.

1981年1月、再び咳嗽が出現。鎮咳剤服用にて改善をみないため、3月、当内科を受診した。外来の心エコー図検査にて右房内腫瘍を発見され、精査目的で、3月14日、第2回目の入院となった。

入院時現症：身長150cm、体重43kgの痩せ型な女性。脈拍120/分、整。血圧112/84mmHg。頸静脈は著明に怒張。呼吸音は正常でラ音は聴取されなかった。心尖部にLevine II度の拡張期ランブル、胸骨左縁に心膜摩擦音を聴取したが、tumor plopは存在しなかった。肝は1横指触知

した。四肢に浮腫なく、神経学的には異常を認めなかった。末梢静脈圧は200mmH₂Oであった。

検査所見：胸部レ線写真では心拡大、肺うっ血所見なく(Fig. 4左)、心電図では洞性頻脈とT波の平低化を認めた(Fig. 4右)。血算では軽度の貧血、血液生化学では血清アルブミン2.8g/dl、 γ グロブリン23.2%、アルカリフォスファターゼ121IU/lの異常を認めたのみであった。血沈は45mm/hrと促進、CRPは3+であった。尿沈査では顕微鏡的血尿が存在した。

心音図検査(Fig. 5)：聴診所見を裏づけるもの

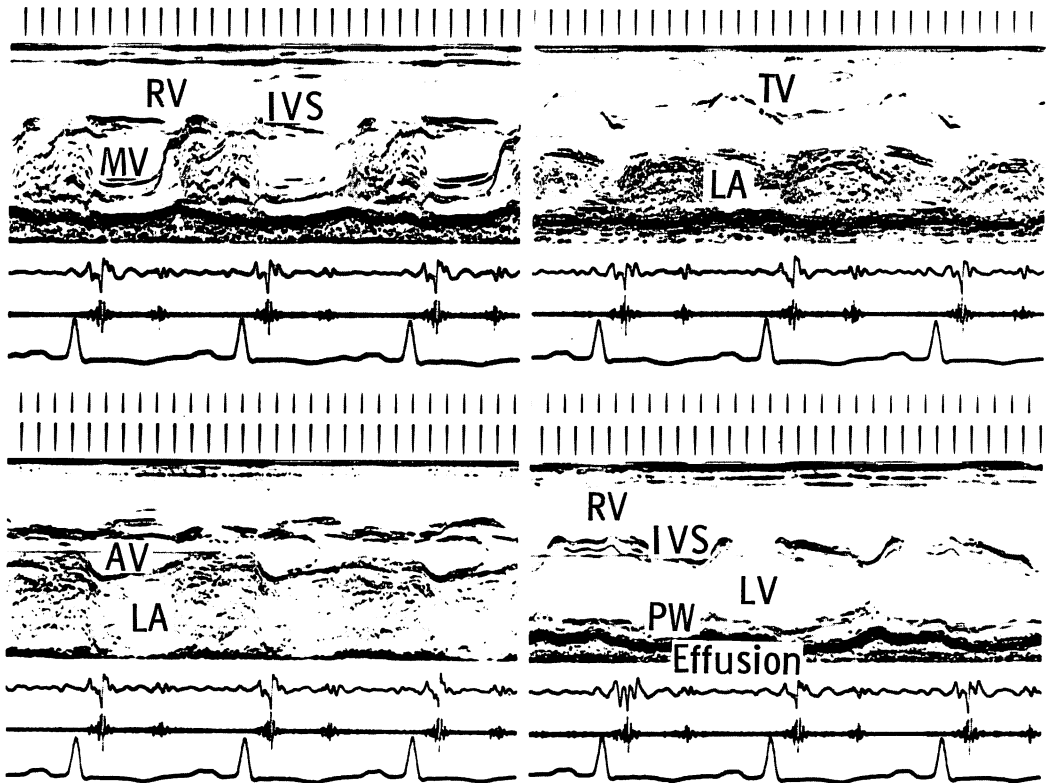


Fig. 2. M-mode echocardiograms on the first admission.

A large abnormal mass in the left atrium (LA) is demonstrated to prolapse into the mitral valve (MV) orifice during diastole. There is no mass in both ventricles and the right atrium. Pericardial effusion is also visualized.

RV=right ventricle; IVS=interventricular septum; AV=aortic valve; TV=tricuspid valve; LV=left ventricle; PW=left ventricular posterior wall.



Fig. 3. Gross photograph of the resected left atrial myxoma at the first operation.
It was attached to the interatrial septum with a short stalk. It was 5×4×3.5 cm in size.

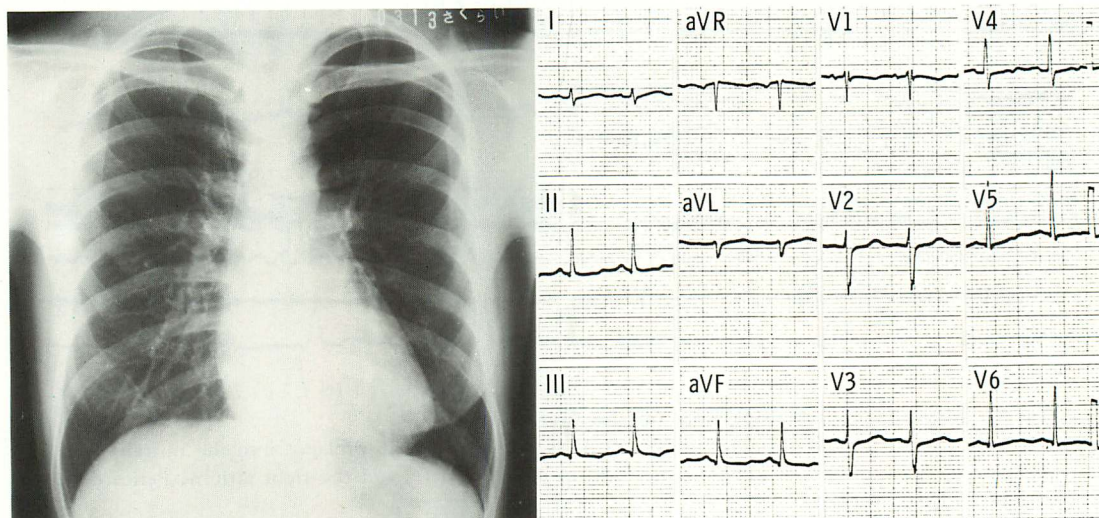


Fig. 4. Chest roentgenogram and electrocardiogram on the second admission.

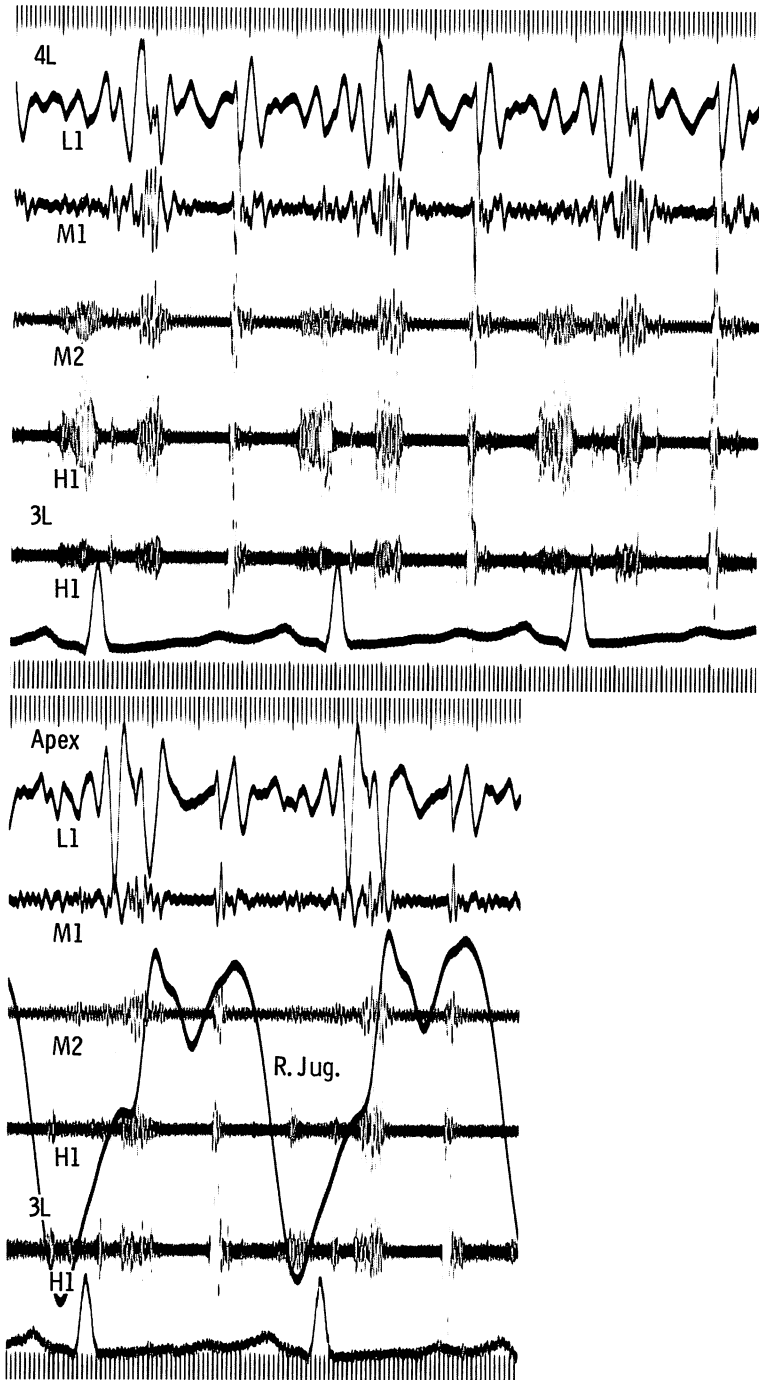
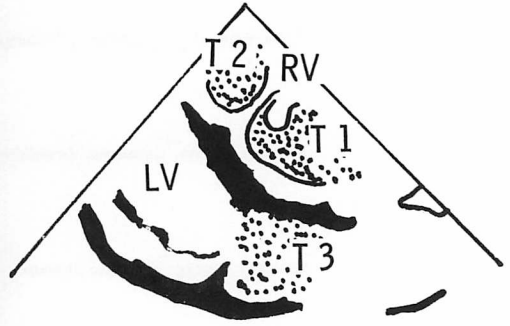
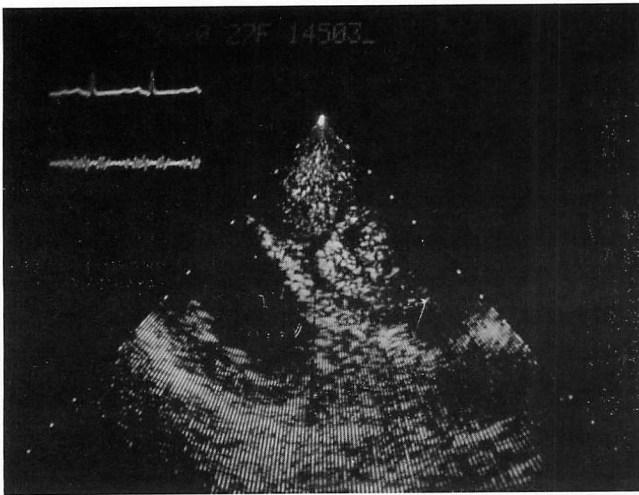


Fig. 5. Phonocardiograms with jugular phlebogram recorded on the second admission.

Systolic and diastolic scratchy sounds are recorded at the third and fourth left intercostal spaces parasternally (3L and 4L). The jugular phlebogram (R. Jug.) shows shallow "x" and deep "y" troughs. An "a" wave is not inscribed.

A



B

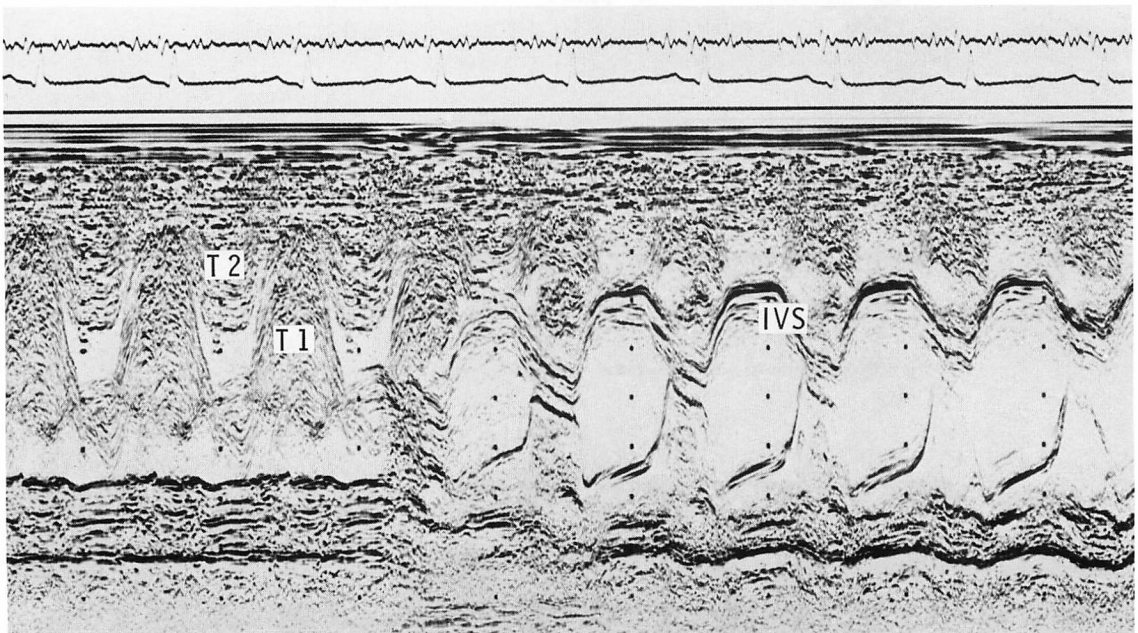


Fig. 6. Two-dimensional (A) and M-mode (B) echocardiograms demonstrating multiple myxomas.

The parasternal four-chamber view shows right atrial (T1), right ventricular (T2), and left atrial (T3) tumors simultaneously. A part of the right atrial tumor is observed to prolapse into the right ventricle through the tricuspid valve orifice. The tricuspid valve is not recorded at this panel. M-mode scan is made from the level of the tricuspid valve to the mitral valve. The left atrial tumor (T3) is also seen to prolapse into the mitral orifice (MV). No abnormal mass was found in the left ventricle.



Fig. 7. Gross photograph of excised myxomas at the second operation.

The largest myxoma was delivered from the right atrium (left). It was attached to the lateral wall of the right atrium. The smallest one was originated from the edge of the interatrial septal patch graft replaced at the time of initial operation (upper right). The ovoid tumor was from the right ventricle (lower right). It was partially attached to the posterior papillary muscle. All tumors were benign histologically. There were no malignant features.

であった。胸骨左縁に前収縮期性および収縮早期性心膜摩擦音が記録された。頸動脈波曲線は重複波 (dicotism) の傾向を示し、頸静脈波曲線は収縮期陽性波を示した。

心エコー図検査 (Fig. 6): 胸骨左縁からの four-chamber view にて右房、右室、左房内にそれぞれ独立した一個の腫瘍が観察された。右房内の腫瘍 (図中の T1) は最も大きく、一部は三尖弁口を通り右室内に逸脱していた。右室内腫瘍 (図中の T2) は卵円形で右室内に留っており、三尖弁口や右室流出路に向う運動は認められなかった。左房内腫瘍 (T3) は3個のうち最も小さかったが、右房内のそれと同様、拡張期に僧帽弁口に僅かに逸脱していた。これは僧帽弁口の short-axis view

で最も明瞭に観察され、僧帽弁口の内側寄りに腫瘍の一部が逸脱するのが認められた。腫瘍の茎はいずれにも認められなかったが、左房腫瘍は心房中隔に隣接しているようであった。心嚢液貯留は認められなかった。

入院後経過: 心膜摩擦音の音量が日により、また体位により変動した以外、著変はなかった。4月3日、当院胸部外科にて第2回の手術が施行された。なお、心血管造影は行わなかった。

人工心肺使用のもと、開心術を施行した。まず右房切開により右房自由壁に付着する右房内腫瘍 (重量 46 g) を摘出し、ついで三尖弁口を通して一部後乳頭筋に付着していた腫瘍 (6.6 g) を切除した。最後に右房側より心房中隔を切開し、前回

手術時に縫着したパッチの辺縁に付着する腫瘍(3g)を摘出した。心房中隔の付着部は前回のパッチを含めて広範囲に切除し,新たに合成線維パッチにて修復した。肉眼的検査では左室内に腫瘍を見出し得なかった。摘出された3個の腫瘍はすべて組織学的には粘液腫で,悪性所見は認められなかった(Fig. 7)。

患者の術後経過は順調で,ふたたび家庭生活に復帰した。

考 案

心粘液腫は心臓原発腫瘍の30~50%を占め,病理組織学的には良性腫瘍と考えられている。75%が左房内に発生し,心房中隔卵円窩部より有茎性に発育するものが多い。右房内発生例は約20%で,残りは心室内に生ずる。多発性粘液腫は約5%を占め⁸⁾,左右両心房内に心房中隔よりダムベル型に発育するものがよく知られている^{4,5)}。4つの心腔内に同時に発生したという報告もある³⁾。

心粘液腫は臨床的には閉塞症状,塞栓症状,多彩な全身症状を呈し⁶⁾,かつては手術,剖検により初めて診断されていたが⁷⁾,今日,心血管造影法⁸⁾,心エコー図法⁹⁾の進歩により術前診断は容易になっている。心臓外科手術の進歩と相まって手術成功例は増加し,粘液腫は完全治癒の疾患と考えられていた。

しかしながら,手術成功例,長期経過観察例の増加は粘液腫の新たな問題点,すなわち再発をめぐり問題を我々に提起している。1967年, Gerbode ら¹⁰⁾は左房粘液腫摘出術4年後に同一部位に粘液腫の再発をみた1症例を報告し,再発の原因を腫瘍付着部位の不十分な切除に帰するとともに,卵円窩部切除を含む広範な切除術の必要性を強調した。この再発第1例の報告以来,広範囲腫瘍摘出術は外科医の間で標準的術式として取り入れられたが,それにもかかわらず,粘液腫再発の報告が散見されている^{11,12)}。

1974年 Read ら¹⁾は再発性粘液腫2例,転移性粘液腫1例を報告し,粘液腫は病理組織学的には

良性腫瘍であるが,再発,転移という悪性の経過をとることがあることから,粘液腫の悪性像(malignant potentiality)を強調した。彼らは2例の再発原因として,とくに症例2で腫瘍細胞が僧帽弁,腱索に播種された顕微鏡像を得たことより,腫瘍細胞の心腔内 implantation を考えた。1976年, Dang ら¹³⁾は原発巣と反対側の心腔に再発した1例(左房原発で右室に再発)を提示し,粘液腫の再発機序として,次の4つの一般的な仮説を挙げた。すなわち①末梢への塞栓と発育,②不完全切除による発生,③播種,④2番目の原発巣の存在,である。Gerbode の第1例¹⁰⁾は②の不完全切除によるものであり,広範な摘出術の適用によってこの機序による再発は防ぐことができる。Read らの再発例(左房原発→胸骨,骨盤等に転移)は①の末梢塞栓の可能性を支持するものである。Dang らは自らの再発例の原因として,原発巣と再発巣との間に解剖学的連絡がないこと,原発巣が再発巣に対して血行学的に下流にあたることから播種(implantation)よりはむしろ別の原発巣の存在を推測している。この根拠として,最初から多発的に発生する粘液腫の報告を挙げている。

我々の症例の再発についてもこれらの点が検討されなければならない。まず原発巣,再発巣ともに心腔内であるから,塞栓によるものではないと考えられる。次に,初回手術時に広範囲な切除が行われているから,不完全切除は否定できないが,考えにくい。3番目の播種については,Dang の症例と同様,反対側心腔(左房原発→右房,右室再発)への再発であり,再発の機序として考えにくいように思える。しかし,当時の病歴の記載によると,①腫瘍が脆く,術中,心腔内に一部がこぼれ,また,②心房中隔の切除を右房側から施行した,という事実がある。したがって術中の操作により腫瘍細胞が両側の心腔に移行した可能性があり,左房の腫瘍細胞が生理的食塩水による十分な洗浄と吸引によっても完全にとりきれなかったのかも知れない。再発の4番目の原因として別の原発巣,pretumor cell からの発育がある。我々

の症例については否定する根拠も肯定する根拠もない。

本症例のように広範囲な腫瘍摘出術にもかかわらず、複数の心腔内に再発した例は我々の調べた限り報告をみない。粘液腫の malignant potentiality¹⁾ を強く疑うものである。

なお、粘液腫の再発率は母集団の数、観察期間に大きく左右され、評価は困難であるが、4~14%とする報告がある^{7,12)}。我々の研究室では過去、心エコー図が記録出来た例として6例の左房内粘液腫を経験しているが、再発例は本例の1例のみである。

以上、粘液腫再発の本態は不明である。したがって確実な予防法はない。不完全切除を防ぐためには広範囲な腫瘍およびその付着部位の切除しかなく、そのためには手術時、断端の組織学的検索が必要であろう。しかし、腫瘍が乳頭筋、弁などの重要な組織から発生している時は完全切除は望めないし、数%の再発の可能性のために弁置換を行うには問題があろう。術中の播種と新たな塞栓を起こさないためには慎重な手術操作が強調される。そして術後は定期的に心エコー図法により追跡することが現時点の最善の策である。これは再発例の報告では常に強調されるどころであり、粘液腫早期発見における心エコー図法の果す役割は非常に大なるものと思われる。

手術所見を提供下さった東京大学医学部胸部外科 浅野献一教授ほか、諸先生に感謝いたします。

文 献

- 1) Read RC, White HJ, Murphy ML: The malignant potentiality of left atrial myxoma. *J Thorac Cardiovasc Surg* **68**: 857, 1974
- 2) 竹中 克, 林 輝美, 羽田勝征, 武田忠直, 村尾 覚, 福島康圭: 心膜液貯留を伴い、急速に心不全が進行した左房粘液腫の1治験例. *内科* **43**: 151, 1979
- 3) McAllister HA, Fonoglio JJ: Tumors of the cardiovascular system. *AFIP*, 1980, p 7
- 4) Imperio J, Summers D, Kransnow N, Piccone VA: The distribution pattern of biatrial myxomas. *Ann Thorac Surg* **29**: 469, 1980
- 5) Dashkoff N, Boersma RB, Nanda NC, Gramiak R, Andersen MN, Subramarian S: Biatrial atrial myxomas—echocardiographic consideration. *Amer J Med* **65**: 361, 1978
- 6) Greenwood WF: Profile of atrial myxoma. *Am J Cardiol* **21**: 367, 1968
- 7) Read RC: Cardiac myxoma and surgical history. *Ann Thorac Surg* **29**: 395, 1980
- 8) Goldberg HP, Glen F, Dotter CT, Steinberg I: Myxoma of the left atrium: Diagnosis made during life with operative and postmortem findings. *Circulation* **6**: 752, 1952
- 9) Schattenberg TT: Echocardiographic diagnosis of left atrial myxoma. *Mayo Clin Proc* **43**: 620, 1968
- 10) Gerbode F, Kerth WJ, Hill JD: Surgical management of tumors of the heart. *Surgery* **61**: 94, 1967
- 11) Kabbani SS, Cooley DA: Atrial myxoma: Surgical considerations. *J Thorac Cardiovasc Surg* **65**: 731, 1973
- 12) Sutton MG St J, Mercier L-A, Gulmni ER, Lie JT: Atrial myxomas: A review of clinical experience in 40 patients. *Mayo Clin Proc* **55**: 371, 1980
- 13) Dang CR, Hurcley EJ: Contralateral recurrent myxoma of the heart. *Ann Thorac Surg* **21**: 59, 1976